



TITLE:

副腎囊腫の1例

AUTHOR(S):

木内, 利明; 藤岡, 秀樹; 高羽, 津; 綿谷, 真理; 暲, 千津子

CITATION:

木内, 利明 ...[et al]. 副腎囊腫の1例. 泌尿器科紀要 1982, 28(9): 1133-1139

ISSUE DATE:

1982-09

URL:

<http://hdl.handle.net/2433/123172>

RIGHT:

副腎嚢腫の1例

大阪大学医学部泌尿器科学教室（主任：園田孝夫教授）

木内 利明・藤岡 秀樹・高羽 津

大阪大学医学部皮膚科学教室（主任：佐野栄春教授）

綿谷 真理・障 千津子

ADRENAL CYST: REPORT OF A CASE

Toshiaki KINOUCHI, Hideki FUJIOKA and Minato TAKAHARA

From the Department of Urology Osaka University Medical School, Osaka, Japan

(Director: Prof. T. Sonoda)

Mari WATAYA and Chizuko SARASHI

From the Department of Dermatology Osaka University Medical School, Osaka, Japan

(Director: Prof. S. Sano)

A 30-year-old female had a radical operation for malignant melanoma on the right buccal on Feb. 18, 1981. When she was examined for metastasis of the malignant melanoma to other organs, plain film of the abdomen showed sandy calcifications in the left suprarenal region. Echography, CT scan, adrenal scintigraphy and angiography were done. She was highly suspected of having a left adrenal cyst, but, the possibility of metastasis of malignant melanoma to the adrenal gland could not be totally excluded.

On June 24, 1981, an exploratory operation was done. The left suprarenal mass was removed through a left flank incision. The macroscopic view of the specimen showed a left multilobular adrenal cyst which was 4 cm in diameter and contained yellow fluid. Histological findings showed that the wall of the cyst was lined by endothelial cells and that the lymphatic vessels in the adjacent adrenal tissue were dilated. Histological diagnosis was a lymphangiomatous adrenal cyst. This case was the 48th case of adrenal cyst in the Japanese literature.

Key words: Adrenal cyst, Calcification, Malignant melanoma

はじめに

副腎嚢腫は臨床的には内分泌学的に不活性であるため特徴的な症状は示さず、腫大した嚢腫に起因する正常臓器の圧迫症状および腫瘤触知が主症状であり一般には無症状に経過することが多いため比較的まれな疾患とされてきた¹⁾が、近年超音波診断法、CT scanなどの診断技術・発展普及に伴い臨床症状に乏しい本症も偶然に発見される機会が増え急速に症例の増加する傾向がうかがわれる。

今回、悪性黒色腫の転移病巣の有無について検索中に偶然左副腎嚢腫を発見した症例を経験したので若干

の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：30歳女性。主婦

初診：1981年6月11日

主訴：左腎上方の石灰化陰影とその精査

家族歴：母親が胃癌にて死亡

既往歴：特記すべき事項なし

現病歴：1981年1月第2子出産直後、右頬部に悪性黒色腫が出現、1981年2月18日に当院皮膚科にて根治的腫瘍摘出術を受け頸部リンパ節郭清を施行するも腫瘍の転移は認められなかった。その後化学療法として

5-(3,3-dimethyl-1-triazeno)-imidazole-4-carboxamide (DTIC), vincristine, 1-(4-amino-2-methyl-5-pyrimidinyl) methyl-3-(2-chloroethyl)-3-nitrosourea hydrochloride (ACNU) 3者併用療法を3回実施するとともに、悪性黒色腫の全身転移病巣の有無を検索中腹部単純X線撮影にて左腎上方に石灰化陰影ありそれに一致して腫瘍形成が認められ、1981年6月11日精査治療を目的として当科に紹介された。

入院時現症：身長 159 cm, 体重 47 kg, 眼瞼結膜・眼球結膜異常なし。胸部打聴診異常なし。腹部平坦、軟にて肝臓・脾臓および腎臓触知しえず、腫瘍も触知しなかった。悪性黒色腫摘出術および皮膚移植術後の瘢痕形成を右頬部から右側頸部、右大腿部および右足背部に認めた。神経学的検査および外性器には異常を認めず、月経も整であった。

入院時検査成績：血圧 116/56 mmHg. 脈拍84/分整。血沈1時間 11 mm, 2時間 24 mm。

血液一般検査：RBC $387 \times 10^4/\text{mm}^3$, Hb 9.5 g/dl, Ht 27.3%, WBC $3500/\text{mm}^3$, 白血球分画は正常。platelet $17.4 \times 10^4/\text{mm}^3$,

血液化学：Na 140 mEq/l, K 3.8 mEq/l, Cl 109 mEq/l, BUN 14 mg/dl, Cr 0.6 mg/dl, Uric acid 3.4 mg/dl, LDH 183 IU., Ca 8.4 mg/dl, Pi 4.3 mg/dl, FBS 90 mg/dl。



Fig. 1. Plain film of the abdomen showing the sandy calcifications at the left suprarenal region

肝機能：T.P. 7.6 g/dl, A/G 1.2, GOT 15 IU., GPT 5 IU., rGTP 7 IU., Alp. 123 IU。

便潜血反応陰性、尿所見および ECG には異常を認めなかった。

内分泌学的検査：尿中 17 KS 1.8 mg/day, 17 OHCS 2.6 mg/day, VMH 12.0 mg/day, E₃ 17.3 μg/day, 血中 renin 1.7 ng/ml, Aldosterone 6.8 ng/dl と異常所見は認められなかった。

X線検査：腹部単純X線撮影では左腎上方に砂状の石灰化陰影を認めるも (Fig. 1), 排泄性腎盂造影では左腎の機能および形態にとくに異常を認めなかった (Fig. 2)。

CT scan：左副腎に一致した部位に表面平滑、内部に石灰沈着を伴った囊腫様の液体貯留を認めた (Fig. 3)。

副腎シンチグラム：¹³¹I-アドステロールによる副腎シンチグラムにて、右副腎は取り込み良好であったが、左副腎は下部に低いながらも取り込みが認められ、上部には腫瘍の存在が示唆された。

血管造影：選択的左腎動脈血管造影にて下副腎動脈の上方への圧排および伸展を認め、左腎との間に血管に乏しい腫瘍の存在が認められた (Fig. 4)。

以上の結果より左腎上部の石灰化沈着を伴う腫瘍は左腎副囊腫であることが強く疑われたが、悪性黒色



Fig. 2. Excretory pyelogram showing normal function and no deviation of the left kidney. Sandy calcifications were shown at the left suprarenal region

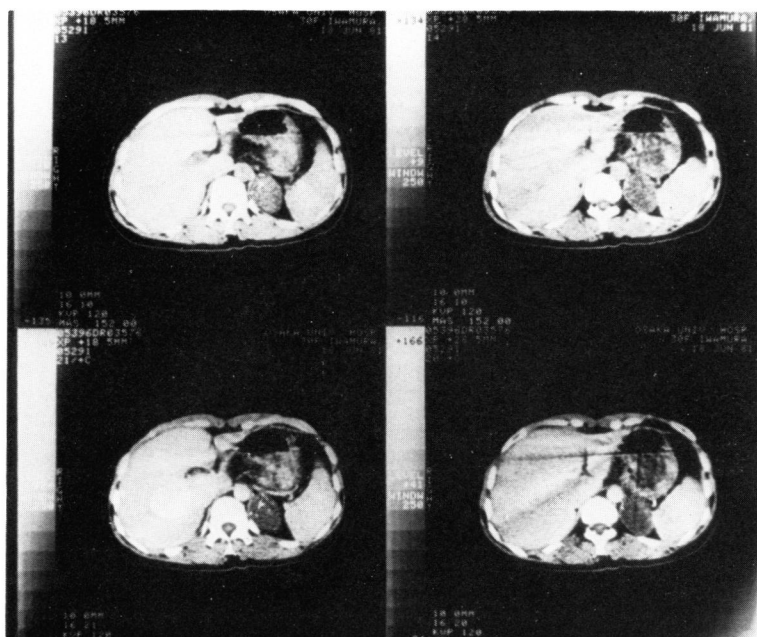


Fig. 3. CT scan showing the presence of cystic mass with sandy calcifications at the left suprarenal region



Fig. 4. Selective angiogram showing the presence of avascular area with stretched left inferior suprarenal artery

腫の副腎転移は完全には否定しえず、その検索を目的として1981年6月24日全身麻酔下にて手術を施行した。

手術所見：左第11肋骨部分切除を伴う腰部斜切開に

て外腹膜的に後腹膜腔に達した。左腎上方には4 cm直径の球状、黄色内容液を透見しうる薄い被膜におおわれた嚢腫が存在し、その壁に密着するようにほぼ正常大の左副腎が認められた。嚢腫の左腎からの剝離は容易であったが、正常左副腎との剝離が困難であったため一塊として摘出した。

摘出標本：薄層板状の石灰沈着が散在する隔壁を伴った数個の多房性副腎嚢腫が認められ正常副腎組織は嚢腫壁に圧排された状態にて存在した。内容液は少し混濁した黄色で内分泌学的検査にて cortisol 69.7 $\mu\text{g/ml}$, aldosterone 759.4 ng/dl と非常に高値を示した。嚢腫隔壁に沈着していた結石は赤外線分光分析の結果、アパタイト結石であった。

組織学的所見：左副腎の皮髄境界部位に石灰沈着を伴った大小の嚢胞を認め、壁内はリンパ管内皮細胞におおわれ、病理組織学的にはリンパ管腫性嚢腫と診断された (Fig. 5)。

なお患者は術後順調に経過し1982年3月現在、悪性黒色腫の再発も認めていない。

考 察

副腎嚢腫についての現在までの報告は1670年 Greisselius²⁾ が副腎嚢腫の破裂により死亡した45歳男性の剖検例を発表して以来、1894年には Pawlik³⁾ が手術的に初めて副腎嚢腫の摘出に成功し、以後1977年まで

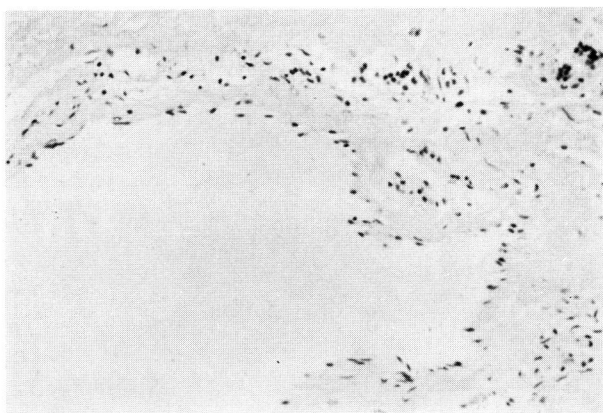


Fig. 5. Histological findings showing that the wall of the cyst was lined by the endothelial cells and dilated lymphatic vessels were observed in the adjacent adrenal tissue

に欧米では約 250 例が報告されている⁴⁾。また本邦においては1933年富澤⁵⁾が剖検例を発表して以来文献上集計しうる限りでは自験例を含めて48例の報告を見るにすぎない。個々の症例については教室の宇都宮ら⁶⁾が46例まで集計しその後1例の報告を認めるのみであるので今回われわれは個々の症例については述べないこととする。いっぽう Wahl⁷⁾は13,996剖検例中9例に、また Hodges⁸⁾は1,100剖検例中2例に本症を認めたと報告し彼らは副腎嚢腫はかならずしもまれな疾患ではなく、むしろ内分泌学的に不活性でありしかも相当な大きさにならなければ臨床症状を呈しないために臨床上まれな疾患とされているのであろうと述べている。今回われわれが経験した症例も悪性黒色腫の全

身転移病巣の有無について検索中に偶然発見された症例であり、今後診断技術の向上に伴い無症状の状態にて発見される症例も増加してくるものと思われる。

1) 分類

Abeshouse⁹⁾は副腎嚢腫をつぎのように6型に分類した。1. 寄生虫性嚢腫, 2. 停滞性嚢腫, 3. 嚢腫性腺腫, 4. 内皮性嚢腫, 5. 偽嚢腫, 6. 不明とし155例を分類し, Foster¹⁰⁾は1. 寄生虫性嚢腫, 2. 上皮性嚢腫, 3. 内皮性嚢腫, 4. 偽嚢腫の4型に分類した。Abeshouse⁹⁾の集計したものを Kearney¹¹⁾の分類にしたがいまとめたのが Table 1 である。

寄生虫性嚢腫は echinococcus 病に合併した症例がほとんどであり、嚢腫壁内に寄生虫を認めることが多

Table 1. Pathological classification and incidence of adrenal cysts.
(Data from Abeshouse et al⁹⁾)

Pathological type	Autopsy	Operative	Total
1. Parasitic cysts	9	1	10
2. Epithelial cysts	10	4	14
a) Retention cysts	2	1	3
b) Cystic adenoma	8	3	11
3. Endothelial cysts	46	22	68
a) Lymphangiomatous	42	22	64
b) Angiomatous	4	0	4
4. Pseudocysts	21	39	60
a) Hemorrhage in normal tissue	16	34	50
b) Hemorrhage in adrenal tumor	5	5	10
Total	86	66	152

Table 2. The incidence of adrenal cysts in Japan

Pathological type	
1. Parasitic cysts	0
2. Epithelial cysts	5
a) Retention cysts	
b) Cystic adenoma	
3. Endothelial cysts	9
a) Lymphangiomatous	9
b) Angiomatous	0
4. Pseudocysts	26
a) Hemorrhage in normal tissue	
b) Hemorrhage in adrenal tumor	
Total	40

く Casoni 皮内反応が陽性となる。本邦ではいまだ報告例がないが、欧米においても 9 例発見されたのみである。上皮性嚢腫は Foster らによれば全体の 9% を占められなものである。もっとも頻度的に多く認められるのは欧米では内皮性嚢腫、その中でもとくにリンパ管腫性嚢腫でありついで偽嚢腫である。本邦においては Table 2 のごとく偽嚢腫が圧倒的に多くついで内皮性嚢腫である。しかし手術症例だけを見ると欧米でも偽嚢腫が 60% を占め、手術症例の報告例がほとんどである本邦と同様な頻度になる。リンパ管腫性嚢腫の発生機序はまだ明らかではないが、次のように考えられている。正常副腎組織内では被膜と髄質にリンパ空間が存在し皮質には認められない。リンパ系路の発達異常すなわち不連続性のためにリンパのうっ滞が発生し多房性に嚢腫が発生するのであると考えられている。偽嚢腫は副腎組織内あるいは副腎腫瘍内への出血により発生するものであるが、前者への出血の原因としては、挫傷、熱傷、糖尿病、尿毒症、妊娠中毒症、重症感染症、ビタミン欠乏症、梅毒、白血病、血液型不適合輸血、副腎梗塞などがあり、後者の腫瘍には褐色細胞腫、副腎腺腫、血管腫および悪性血管内皮細胞腫などがある。

2) 年齢、性別、患側

すべての年代に本症を認めるが Abeshouse ら⁹⁾ は 50 歳～60 歳代に最も多いと報告している。本邦においても小児の報告例はみられないが 22 歳より 73 歳まで割合広範囲の年代に発生している。性別に関して欧米では 3 : 1 で女性に、また本邦においては 31 : 17 でやは

り女性に多く発生している。患側については欧米では左右差はほとんどなく、また 8 例に両側発生を認めているが、本邦においては 30 : 15 で左側に多く発生し両側発生は報告は見られない。

3) 嚢腫内容液の内分泌学的検査

古くは Ballance¹²⁾ による adrenaline の検出に始まり Forough¹³⁾ や Mnaymneh⁴⁾ らにより catecholamine および corticosteroid が測定されているが、最初に系統的にホルモン活性を調べたのは Jacobi ら¹⁴⁾ であった。彼らによれば嚢腫内容液および嚢腫被膜の catecholamine および corticosteroid の活性は副腎組織自体よりは低いが、血清よりは高値を示し、しかも嚢腫被膜にはホルモン合成能がないことから、副腎嚢腫内の内分泌学的活性は周囲組織からの受動的拡散により決定されることを示した。本邦においては嚢腫内容液の内分泌学的検討はあまりおこなわれていないが、仲田ら¹⁵⁾ は 17 OHCS 0.76 mg/dl, 17 KS 1.7 mg/dl, estrogen 1.1 μg/dl と非常に高値であったと報告し宇都宮ら⁶⁾ は cortisol, corticosterone, catecholamine, aldosterone, androsterone を測定し, cortisol, aldosterone が有意に高かったと述べている。われわれも cortisol 69.7 μg/ml, aldosterone 259.7 ng/dl と血清に比して非常に高値であった。本症例では catecholamine の測定は施行しえなかったが、今後このような内分泌学的検索をおこなうことにより病理組織学的診断と合わせて副腎嚢腫の発生部位をより正確に決定しうるものと考えられる。

4) 症状、診断

内分泌学的に不活性であるために臨床症状は嚢腫の腫大により出現することが一般的であり、三大症状として腫瘍触知、腰部鈍痛および胃腸不定愁訴が知られている。また高血圧を伴うこともあり本邦においては 48 例中 16 例に高血圧が合併しており、その原因として Raphavaiah¹⁶⁾ らは腫大した嚢腫による腎組織の圧迫および腎莖部の伸展により高血圧が発生すると述べているが、嚢腫摘出術後も高血圧の改善を認めなかった症例もあり、その因果関係は明らかではない。

診断法としてはまず腹部単純 X 線撮影が有用である。副腎嚢腫は淡い腫瘍陰影の周囲に eggshell 型の石灰化陰影を伴うことが特徴的で結節状の石灰沈着を伴うことの多い副腎悪性腫瘍とは鑑別の上でも重要である。Foster ら¹⁰⁾ は副腎嚢腫の症例の約 10% にこのような石灰沈着を認めている。このような石灰沈着を伴った副腎嚢腫は病理組織学的に偽嚢腫であることがほとんどであるが、まれに本症例の様に内皮性嚢腫にも石灰沈着を認めることがある⁹⁾。本症例は散在性に隔

壁内に石灰沈着を伴ったために腹部単純X線撮影にて砂状に見えたが、時期的にもうすこし遅れていれば偽嚢腫のような eggshell 型の石灰化陰影を呈してくるのか、あるいはこのような砂状の石灰化陰影は内皮性嚢腫に特徴的なものであるのかは現在のところ不明である。

そのほかの診断法として、排泄性腎盂造影、超音波診断法、CT scan、副腎シンチグラムおよび血管造影があり、内部に液体貯留を認めたその周囲に伸展された血管像を認めれば、ほぼ確定診断は得られるものと思う。

鑑別診断としては、Foster ら¹⁰⁾ は肝臓・脾臓・腎臓などの嚢腫および悪性腫瘍、胆嚢の蓄膿あるいは大動脈・腎動脈の動脈瘤などを述べている。

5) 治療

Foster ら¹⁰⁾ は副腎嚢腫は良性疾患であるため腫大した嚢腫による圧迫症状がなければ必ずしも手術適応にはならないと述べているが、Kearney ら¹¹⁾ は確定診断を得るためにできるかぎり手術をおこなうべきであると述べ、手術方法は原則として周囲臓器を可能な限り保存的に処理することとし、不可能な症例では副腎嚢腫壁から悪性腫瘍が発生したという報告ははまだ見あたらないので内容物の吸引のみにとどめるべきであると述べている。

悪性腫瘍との鑑別診断が不可能のときには手術の絶対適応となる。本症例は悪性黒色腫の転移病巣の検索中に偶然発見されたものであるが一般に悪性黒色腫の転移臓器として多く認められるものは肺臓、肝臓、脾臓および副腎であり¹²⁾、また本症例のように妊娠中に多発発生したと思われ、出産直後に発見された症例は非妊娠時に発生したものに比して進行度が速いと言われている¹³⁾。以上のような状況であるため副腎嚢腫とほぼ確定診断がついているものの完全には悪性黒色腫の転移を否定しきれず、また今後悪性黒色腫に対する化学療法がさらに必要であるか否かについて重要な因子となるために手術を施行した。

結 語

悪性黒色腫の全身転移病巣の有無について検索中に偶然発見された30歳女性の左副腎嚢腫の1例を報告し、若干の文献的考察を加えた。なお本症例は文献上集計しうる限り48例目にあたる。

本論文の要旨は第96回日本泌尿器科学会関西地方会にて発表した。

文 献

- 1) Cheema P, Cartagena R, Staubitz W: Adrenal cysts: diagnosis and treatment. *J Urol* **126**: 396~399, 1981
- 2) Greisclius: Cited by Doran AHG: Cystic tumor of suprarenal body successfully removed by operation. *Brit Med J* **1**: 1558, 1908
- 3) Pawlik K: Cited by M'Cosh: Casuistischer Beitrag zur Diagnose und Therapie der Geschwulste der Nierengegend. *Arch Klin Chir* **53**: 571~619 1896
- 4) Mnaymneh LG, Slim M, Muakassa K: Adrenal cysts: Pathogenesis and histological identification with a report of 6 cases. *J Urol* **122**: 87~91, 1979
- 5) 富澤英一: 副腎淋巴嚢腫ノ1例. 慶応医学 **13**: 1151~1166, 1933
- 6) 宇都宮正登・奥山明彦・松田 稔・友渕 基・高光義博: 副腎嚢腫の1例. 泌尿紀要 **28**: 183~190, 1982
- 7) Wahl HR: Adrenal cysts. *Amer J Path* **27**: 758, 1951
- 8) Hodges FV, Ellis FR: Cystic regions of the adrenal gland. *Arch Path* **66**: 53, 1958
- 9) Abeshouse GA, Goldstein RB, Abeshouse BS: Adrenal cysts: Review of the literature and report of three cases. *J Urol* **81**: 711~719, 1959
- 10) Foster DG, Calif A: Adrenal cysts. *Arch Surg* **92**: 131~143, 1966
- 11) Kearney GP, Mahoney EM: Adrenal cyst. *The Urologic Clinics of North America*. Glenn JF **4**: 273~283. Saunders company, Philadelphia, London, Toronto. 1977
- 12) Ballance HA: cyst of the right suprarenal capsule removed by operation. *Brit Med J* **2**: 926~923, 1923
- 13) Foroughi E: Calcified simple parenchymal cyst of the adrenal gland. *J Urol* **94**: 504~510, 1965
- 14) Jacobi JD, Carballeira A, Fishman LM: Adrenal cyst: Hormonal contents and functional evaluation. *Acta Endocr* **88**: 347~353, 1978
- 15) 仲田浄治郎・町田豊平・藤田富士男・三木 誠・大石幸彦・赤阪雄一郎・小寺重行・近藤直弥・高橋知 宏・城 謙輔・藍沢茂雄: 巨大副腎嚢腫の

- 1 例. 泌尿紀要 27: 157~162, 1981
- 16) Raphavaiah NV, Singh SM: Adrenal cyst associated with hypertension. Brit J Urol 47: 136, 1975
- 17) Gupta TD, Brasfield R: Metastatic melanoma: A clinicopathological study. Cancer 17: 1323~1339, 1964
- 18) Houghton AN, Flannery J, Viola MV: Malignant melanoma of the skin occurring during pregnancy. Cancer 48: 407~410, 1981
- (1982年4月6日受付)

腸溶、フトラフルE顆粒新発売。たゆまざる研究の結果、長時間効果持続・長期連続投与可能な腸溶顆粒が、またひとつ加わりました。フトラフルの5剤型が遂に完成しました。



↑
フトラフルズボ・ズボS
3つの吸収経路

完成5剤型●注、カプセル、スボ、細粒、E顆粒（新発売）
抗悪性腫瘍剤

健保適用

フトラフル®

Futraful

(FT-207) 一般名 Tegafur

1. フトラフルは主に肝臓で活性化され、活性物質である5-FU、FUR、FUMPの濃度が長時間持続します。この長時間持続性は代謝拮抗剤による癌化学療法において極めて重要なことです。
2. フトラフルはmasked compoundのため、副作用が軽微で、長期連続投与が可能です。
3. 初回治療にも非初回治療にも有効であり、癌化学療法における寛解導入のみならず、寛解強化療法、寛解維持療法として使用され特に病理組織学的に腺癌と診断された症例に有効です。



大鵬薬品工業株式会社

〒101 東京都千代田区神田司町2-9